



중년 여성의 중비갑개에서 기원한 혈관섬유종 1예

김보수 · 김용완 · 이근익

인제대학교 의과대학 해운대백병원 이비인후과학교실

A Case of Angiofibroma Arising from the Middle Turbinate in a Middle-Aged Woman

Bo-Soo Kim, Yong-Wan Kim, Keun-Ik Yi

Department of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery, Inje University Haeundae Paik Hospital, Busan, Korea

ABSTRACT

Angiofibroma which is rare benign tumor found in the nasal cavity is often called juvenile nasopharyngeal angiofibroma because it occurs mainly in the posterior lateral wall of the nasopharynx of adolescent males. It is known that outpatient biopsy is contraindicated due to its hypervascularity which has the potential for massive bleeding. It is difficult to recognize in advance when it is observed as a form originating outside the nasopharynx. We report a case of successfully treated angiofibroma without preoperative embolization originating from the middle turbinate in a 63-year-old woman with nasal obstruction, along with a literature review.

KEY WORDS: Angiofibroma; Middle turbinate; Endoscopic surgery.

서론

혈관섬유종(angiofibroma)은 비강에 드물게 발생하는 과혈관성의 양성 종양이다.¹⁾ 주로 청소년기 남자의 비인두에서 호발하기 때문에 청소년기 비인강 혈관섬유종(juvenile nasopharyngeal angiofibroma)으로 불린다.²⁾ 조직학적으로는 양성이나 임상적으로는 주위 조직으로의 국소 침윤, 출혈, 높은 재발률의 특성을 보여 악성처럼 간주한다.³⁾ 혈관섬유종은 기원 부위에 따라 비인강 혈관섬유종 및 비인강 외 혈관섬유종으로 나뉘며, 비인강 혈관섬유종은 대부분 비인두의 익돌구개와 주변의 후비공 조직과 접형 구개공에서 기원하는 것으로 알려져 있다. 비인강 외 혈관섬유종은 매우 드물게

관찰되며, 그중에서도 중비갑개에서 기원한 경우는 국내 1예를 포함하여 현재까지 총 6예만이 보고되었다.⁴⁻⁹⁾ 최근 저자들은 확산강조 자기공명영상(diffusion magnetic resonance imaging, diffusion MRI)에서 발견한 우측 중비갑개 기원의 비인강 외 혈관섬유종을 술전 색전술 없이 내시경적으로 완전한 제거가 가능하였던 1예를 경험하여, 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

63세 여자 환자가 회전성 어지러움을 주소로 신경과에 내원하였으며, 뇌경색 감별을 위한 확산강조 자기공명영상에서 우

Received: November 7, 2022 / Revised: November 30, 2022 / Accepted: December 29, 2022

Corresponding author: Keun-Ik Yi, Department of Otorhinolaryngology-Head & Neck Surgery, Inje University Haeundae Paik Hospital, Busan 48108, Korea

Tel: +82-51-797-2290, Fax: +82-51-797-2304, E-mail: cross_lette@hanmail.net

Copyright © 2023. The Busan, Ulsan, Gyeongnam Branch of Korean Society of Otolaryngology-Head and Neck Surgery.

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

측 비강 내 고신호강도를 나타내는 2 cm 크기의 종물이 발견되어 이비인후과로 의뢰되었다(Fig. 1). 환자는 점점 악화되는 비폐색 증상이 있었으나, 이에 대한 검사 및 치료는 시행하지 않고 경과관찰 중이었다. 비강 내시경 검사에서 우측 중비갑개 후하방에서 혈관이 잘 발달된 선홍색 무경성 종물이 둥글고 매끈한 형태로 관찰되었다(Fig. 2A). 조영증강 전산화단층촬영(computed tomography, CT)에서는 비균질한 양상의 조영증강을 보이는 종물이 확인되었다(Fig. 3). 종괴 주변으로 골미란, 골파괴 소견은 없었으며, 부비동, 안와, 두개내 침범도 관찰되지 않았다. 전신마취하 내시경적 제거를 계획하였고,

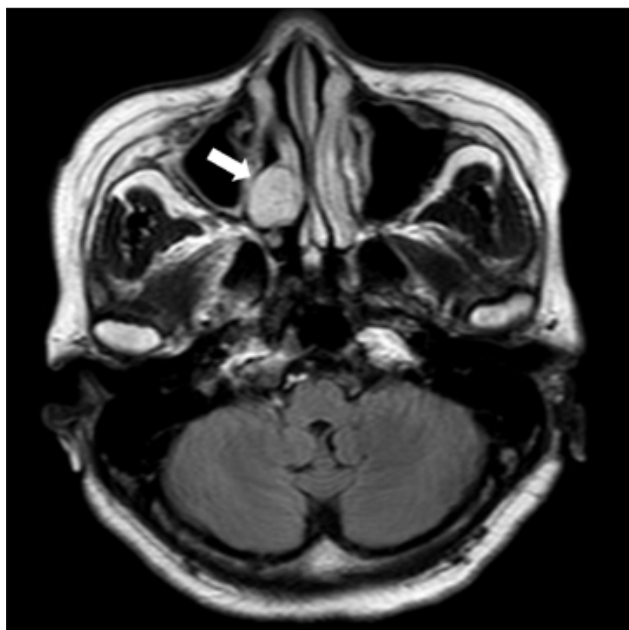


Fig. 1. Preoperative magnetic resonance imaging (MRI) finding. Axial fluid attenuated inversion recovery image shows 2.0×1.5 cm sized well defined ovoid mass with high signal intensities at posterior portion of right middle turbinate (arrow).

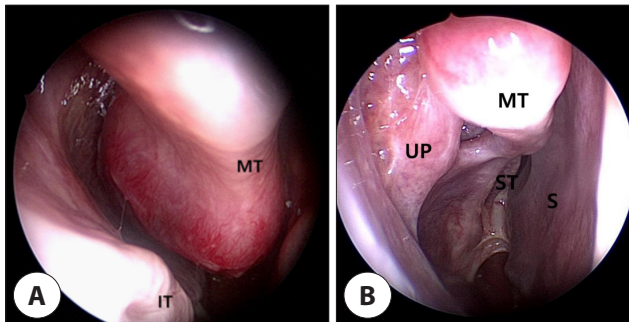


Fig. 2. Endoscopic findings. A: Preoperative endoscopic finding. A 2 cm sized mass with hypervascularity is shown at right middle turbinate. B: Postoperative endoscopic finding. There is no recurrence of the tumor 18 months after surgery. UP: uncinate process, ST: superior turbinate, MT: middle turbinate, S: septum, IT: inferior turbinate.

nasal scissors 및 angled cutting forceps를 이용해 종물을 완전히 절제하였다. 종물 제거 후 출혈은 심하지 않았으며, 양극성 전기소작기(bipolar coagulation forceps)를 이용한 단순 전기 소작으로 충분한 지혈이 이루어졌다. 종물의 악성화를 의심할 만한 소견은 없었다.

병리학적 소견상 종물은 섬유기질 사이로 풍부하고 치밀한 혈관 증식을 보였다. 헤마톡실린 에오신 염색(H&E staining) 표본에서 경계가 좋지만 피막은 없는 고형성 종괴가 증충편평상피 아래에 관찰되었고, 주로 타원 모양이거나 길쭉한 모양의 세포가 다량의 아교질과 섞여 있었고, 세포이형성이나 세포분열은 관찰되지 않았다(Fig. 4A). 평활근이나 근상피세포를 확인할 수 있는 smooth muscle action 면역 조직 화학 염색에서는 양성(Fig. 4B), 신경능 표지 항원인 S-100 단백질 염색에서는 음성(Fig. 4C), 혈관의 내피세포에 발현되는 CD31에 대한 면역조직 염색에서는 양성 소견을 보였다(Fig. 4D). 이를 종합하여 최종적으로 혈관섬유종으로 진단을 하였다. 환자는 별다른 합병증 없이 퇴원하였고, 수술 후 18개월이 지난 현재까지 재발 소견 없이 경과관찰 중이다(Fig. 2B).

고찰

혈관섬유종은 기원 부위에 따라 비인강 혈관섬유종과 비인강 외 혈관섬유종으로 나뉘며, 각각 다른 특징을 가지고 있어 진단이 어려울 수 있다.¹⁰⁾ 비강 내 발생하는 혈관섬유종 중 대부분을 차지하는 비인강 혈관섬유종은 청소년기 남자의 비인두에서 가장 호발하는 것으로 알려져 있다.²⁾ 비강의 익돌구개와 주변의 후비공 조직과 접형구 개공에서 기원하고, 그 크기가 확장되면서 비강의 뒤쪽과 비인강을 포함하여 부비동, 안구, 구개 기저부를 침범한다.⁴⁾ 이로 인한 증상으로는 코막힘, 코피가 가장 흔하며, 그 외 안면 변형, 비음, 비강 분비물, 이

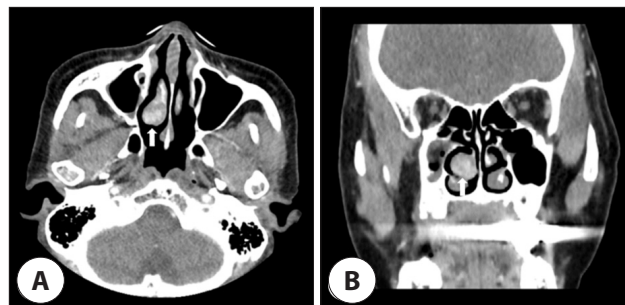


Fig. 3. Preoperative CT findings. Axial (A) and coronal (B) view of CT with contrast enhancement (arrows) shows an heterogenous enhancing ovoid mass at right middle turbinate. CT: computed tomography.

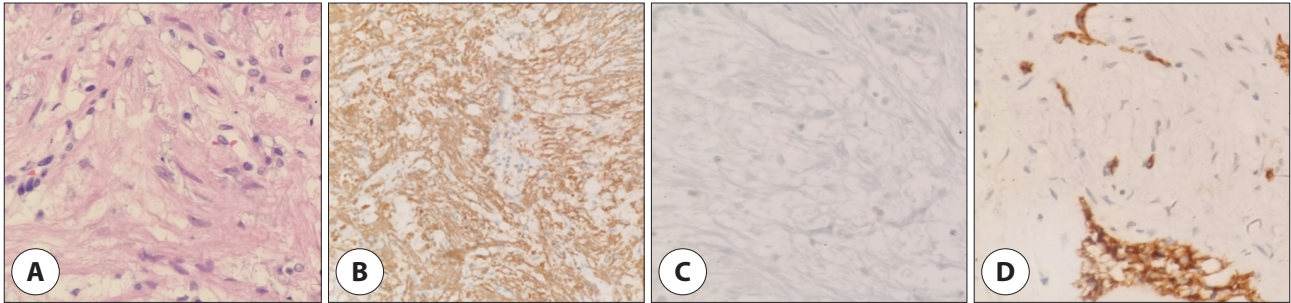


Fig. 4. Pathologic findings. A: H&E stain reveals fibrocytes and blood vessels with endothelial cell lining (H&E stain, ×400). B: Vessel walls are positive for SMA (SMA, ×400). C: S100 antibody reveals negative (S100, ×400). D: Endothelial cells are highlighted by CD31 immunoreactivity (CD31 immunoperoxidase stain, ×400). H&E: hematoxylin and eosin stain, SMA: smooth muscle actin.

충만감, 두통 등이 나타날 수 있다.¹⁰⁾ 보고된 재발률은 약 25%이며, 재발률에 영향을 줄 수 있는 인자로는 환자의 나이, 종양의 혈관 분포 및 위치, 증상 지속기간 등이 있다.¹⁾

이에 반해 비인강 외 혈관섬유종은 매우 드물게 발견되는데, 비인강 혈관섬유종에 비해 발생하는 연령대가 높고 넓으며 여성 환자의 비율도 약 25%로 높다.¹¹⁾ 비인강 외 혈관섬유종의 증상은 비인강 혈관섬유종의 증상과 비교 시 비특이적이고 위치와 범위에 따라 다양하게 나타나며, 대체로 증상 발현이 비인강 혈관섬유종보다 빠르다.¹¹⁻¹³⁾ 발생 부위는 비중격이 가장 많고, 그 뒤로 상악동, 하비갑개, 사골동 순이다. 본 증례와 같이 중비갑개에 기원한 혈관섬유종의 경우는 전체 비인강 외 혈관섬유종 중 1.7%에서만 확인되었다.²⁾ 조영제를 이용한 전산화단층촬영에서 보통 조영이 증강된 종물을 관찰할 수 있지만, 균일하지 않거나 오히려 조영 증강이 뚜렷하게 보이지 않는 경우도 있다.¹⁴⁾ 재발률은 2% 정도로 비인강 혈관섬유종에 비해 매우 낮게 보고되었다.²⁾

본 증례를 포함한 현재까지 보고된 중비갑개에서 기원한 혈관섬유종 7예를 분석하였을 때, 평균 연령은 29.1세(13-63세)이었으며, 성별은 남자 4명, 여성 3명으로 비슷한 비율을 보였다. 모든 환자들이 코막힘 증상을 호소하였으며, 대부분 코피를 동반하였고 2명의 환자에서는 안면부 통증도 있었다. 개방접근법(open approach)으로 수술한 경우는 총 2예로, 내시경적 제거 이후 재발하여 구순하 안면중심 접근법(midfacial degloving approach)으로 수술한 경우와, 외측 비절개술(lateral rhinotomy)을 이용하여 종양을 제거한 경우가 있었다. 이는 2000년 이전에 시행한 수술 접근법이었으며, 2000년 이후에는 모두 내시경적으로 제거를 시행하였다. 수술 후 평균 추적관찰 기간은 8.4개월(1-18개월)이었고, 재발은 1예가 있었으나 개방접근법을 이용한 재수술 이후 재발 소견은 없었다.

혈관섬유종의 근본적 치료는 수술적 제거를 원칙으로 하며, 최근에는 덜 침습적이고 치료 성적도 우수한 내시경적 제거를 많이 시행하고 있다.¹⁵⁾ 병변이 광범위하거나 수술적 접근이 어려운 경우에는 방사선 치료를 고려할 수 있다.¹⁾ 확진은 조직 검사로 하나 대량출혈의 위험성이 있어 수술 전에는 시행하지 않는 것이 원칙이다.¹⁶⁾ 수술 전 혈관조영술을 시행하여 혈관 분포 및 혈류 역학을 파악하고, 색전술을 시행하여 수술 중 발생할 수 있는 출혈량을 줄일 수 있다.¹²⁾ 비인강 혈관섬유종의 경우는 대부분 수술 전 색전술을 시행하지만, 비인강 외 혈관섬유종의 경우 그 위치에 따라 색전술 시행 여부를 결정하는 경우가 많다. 이는 기원하는 위치에 따라 발생기전이 다를 수 있고 영양 혈관(feeding vessel)의 분포가 다양할 수 있기 때문으로 생각된다. 대체로 비강 측벽인 하비갑개나 중비갑개에서 기원하는 경우는 비인강 혈관섬유종과 같이 색전술을 시행하는 경우가 많았으며 비중격에서 기원하는 경우 시행하지 않았다. 국내에서 보고된 비중격에서 기원한 혈관섬유종의 경우도 수술 전 색전술을 시행하여 종양을 많은 출혈 없이 제거하였다.⁹⁾

본 증례의 경우에는 종양의 크기가 비교적 작은 편이고, 우측 중비갑개 후방에 국소적으로 위치한 종양이었다. 내시경 소견에서 혈관이 매우 발달한 종물로 관찰되었기 때문에 대량출혈의 가능성을 고려하여 외래에서 조직검사는 시행하지 않았다. 중비갑개에 분포하는 혈관분지는 대부분 외측후비동맥(posterior lateral nasal artery)으로부터 혈액공급을 받는 것으로 알려져 있고,¹⁷⁾ 이 분지에서의 출혈은 단순 소작술만으로도 지혈이 가능하기 때문에 본 증례의 경우에도 수술 중 충분히 지혈이 가능할 것으로 생각되어 수술 전 혈관조영술 및 색전술 없이 수술적 절제를 계획하였다.

수술 후 합병증으로 비출혈, 가피형성, 이관기능장애 등이 있으며, 예후는 비교적 좋은 편이나 두개강 내 확장이나 두개

저 침윤으로 인한 사망 보고 사례가 있으며, 재발 가능성이 있어 정기적인 추적관찰이 필요하다.¹⁸⁾

결론

혈관섬유종은 대부분 사춘기 남성의 비인강에 발생하는 양성 종양이지만, 드물게는 비인강 외에 발생이 가능하며, 이 경우 연령대가 다양하고 여성에서 발생하는 비율이 더 높아진다. 임상 양상도 다르게 나타날 수 있어 감별에 주의를 기울여야 한다. 가능하다면 내시경적 제거를 주로 시행하고 대량 출혈의 가능성이 있어 수술 전 색전술을 시행하는 경우가 많으나, 증비갑개에 발생한 혈관섬유종의 경우 단순 소작술만으로도 충분한 지혈 효과를 기대할 수 있다.

Acknowledgements

Not applicable.

Funding Information

Not applicable.

Conflicts of Interest

No potential conflict of interest relevant to this article was reported.

ORCID

Bo-Soo Kim, <https://orcid.org/0000-0003-4159-7336>

Yong-Wan Kim, <https://orcid.org/0000-0002-6010-312X>

Keun-Ik Yi, <https://orcid.org/0000-0002-7924-5646>

Author Contribution

Conceptualization: Yi KI.

Data curation: Yi KI.

Formal analysis: Kim YW.

Methodology: Yi KI.

Validation: Kim YW.

Investigation: Kim BS.

Writing - original draft: Kim BS.

Writing - review & editing: Kim BS, Kim YW, Yi KI.

Ethics Approval

Not applicable.

References

1. Windfuhr JP, Remmert S. Extranasopharyngeal angiofibroma: etiology, incidence and management. *Acta Otolaryngol* 2004;124(8):880-9.
2. Windfuhr JP, Vent J. Extranasopharyngeal angiofibroma revisited. *Clin Otolaryngol* 2018;43(1):199-222.
3. Bremer JW, Neel HB 3rd, Desanto LW, Jones GC. Angiofibroma: treatment trends in 150 patients during 40 years. *Laryngoscope* 1986;96(12):1321-9.
4. Péloquin L, Klossek JM, Basso-brusa F, Gougeon JM, Toffel PH, Fontanel JP. A rare case of nasopharyngeal angiofibroma in a pregnant woman. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1997;117(6):S111-4.
5. Huang RY, Damrose EJ, Blackwell KE, Cohen AN, Calcaterra TC. Extranasopharyngeal angiofibroma. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2000;56(1):59-64.
6. Singhal SK, Gupta N, Verma H, Dass A, Kaur A. Extranasopharyngeal angiofibroma: report of two cases. *Egypt J Ear Nose Throat Allied Sci* 2014;15(1):73-6.
7. Toplu Y, Can S, Sanlı M, Sahin N, Kizilay A. Middle turbinate angiofibroma: an unusual location for juvenile angiofibroma. *Braz J Otorhinolaryngol* 2018;84(1):122-5.
8. Hassan MF, Nagi K, Saxena SK, Srinivas BH. Middle turbinate angiofibroma in an adolescent boy. *BMJ Case Rep* 2022;15(2):e246490.
9. Lim DJ, Kang SH, Jung MS, Kim HG. A case of angiofibroma arising from the middle turbinate of an adult woman. *Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg* 2005;48(4):543-6.
10. Mohindra S, Grover G, Bal AK. Extranasopharyngeal angiofibroma of the nasal septum: a case report. *Ear Nose Throat J* 2009;88(11):E17-9.
11. Szymańska A, Szymański M, Morshed K, Czekajka-Chehab E, Szczerbo-Trojanowska M. Extranasopharyngeal angiofibroma: clinical and radiological presentation. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013;270(2):655-60.
12. Tasca I, Ceroni Compadretti G. Extranasopharyngeal angiofibroma of nasal septum. A controversial entity.

- Acta Otorhinolaryngol Ital 2008;28(6):312-4.
13. Lee GE, Kim TG, Bae KE, Cho KR, Sohn JH, Kim BY, et al. Extranasopharyngeal angiofibroma of the nasal septum: a case report. J Korean Soc Radiol 2019; 80(4):750-5.
 14. Park CW, Park SK, Kim JY, Kwon JH. Extranasopharyngeal angiofibroma arising from the nasal septum: 2 cases report. J Clin Otolaryngol Head Neck Surg 2013; 24(1):80-4.
 15. Persky M, Tran T. Acquired vascular tumors of the head and neck. Otolaryngol Clin North Am 2018; 51(1):255-74.
 16. Kwon SH, Cheong KS. A case of juvenile nasopharyngeal angiofibroma-transnasal endoscopic surgery. Korean J Otorhinolaryngol Head Neck Surg 1999;42(1): 114-7.
 17. Lee HY, Kim HU, Kim SS, Son EJ, Kim JW, Cho NH, et al. Surgical anatomy of the sphenopalatine artery in lateral nasal wall. Laryngoscope 2002;112(10):1813-8.
 18. Sarpa JR, Novelty NJ. Extranasopharyngeal angiofibroma. Otolaryngol Head Neck Surg 1989;101(6):693-7.